

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患等政策研究事業）
分担研究報告書

人工内耳装用児の言語能力向上のための効果的な療育方法の確立に向けた研究

研究分担者

山本修子 国立成育医療研究センター 小児外科系専門診療部耳鼻咽喉科 医員

研究要旨

先天性難聴児の脳データベースを構築し、年齢や療育環境による脳の構造の違いを明らかにするため、これまでに先天性難聴児4例のMRIをデータベースに登録した。また、FCEI（聴覚障害児のための家族を中心とする早期介入）を推進するため、聴覚障害児診療の模擬動画を作成し、耳鼻咽喉科医を対象としたクルズスを実施した。人工内耳装用児の療育手法として重要な Auditory Verbal Therapy (AVT) について、日本語環境に対応した手法を広めるための教科書の第3章の原稿執筆を担当した。現在校正中で近日中に出版予定である。

A. 研究目的

- ①先天性聴覚障害児・者の難聴脳データベースを作成する。聴覚活用教育を受けた子供と視覚活用教育を受けた子供との難聴脳データベースを比較する。難聴脳データベースから人工内耳装用効果予測モデルを構築する。
- ②Family-Centered Early Intervention (FCEI: 聴覚障害児のための家族を中心とする早期介入) updateを推進する。
- ③Auditory Verbal Therapy (AVT) について、そのエビデンスをまとめ、日本語環境に対応した手法を開発する。

B. 研究方法

- ①聴覚障害児・者の難聴脳データベースの作製
＜対象＞
以下の基準を全て満たす者とする。
(1)先天性難聴の方
(2)両側とも平均聴力レベル 40dBHL 以上の方。
(3)本研究への参加にあたり十分な説明を受けた後、十分な理解の上、患者本人または代諾者の自由意思による文書同意が得られた方。
＜MRI 撮影方法＞
(1)同意を得られた研究参加者全員に、全脳 Surface-based Morphometry のための構造 T1 強調画像 (1mm isotropic) を全例におこなう
(2)同意を得られた研究参加者のうち、鎮静をせずに撮影可能な症例には、(1)に加えて機能的結合解析のための安静時 fMRI 画像 (2mm isotropic, MB8; TR 720 ms; AP, PA phase encoding) をお

こなう。

撮影した MRI 画像を本研究専用のクラウドに登録し、臨床情報を個人情報が含まれない状態でデータベースに登録する。

②FCEI update の推進

FCEI update に基づいた早期介入ロールプレイ模擬動画を作製する。精密聴力検査を行う施設の耳鼻咽喉科医師を対象に講習会を行い、講習内容の理解を深めるために模擬動画を活用する。

③日本語 AVT テキストブックの製作

第3章 AVT と聴覚・補聴 の執筆を担当する。

(倫理面への配慮)

本研究のうち、①聴覚障害児・者の難聴脳データベースの作製では患者の情報をデータベースに登録するが、その際プライバシーを保護するため、研究対象者の氏名、現住所の詳細、電話番号、E メールアドレス、を取得しない。医療情報は症例登録番号を用いて同定され、研究の結果が公表される場合にも研究対象者の身元のプライバシー保護に配慮する。また、研究参加者自身は未成年であり、未就学児には保護者から同意を取得し、就学後の児には年齢に合わせたアセントも行う。

C. 研究結果

- ①聴覚障害児・者の難聴脳データベースの作製

2例から研究参加の同意を取得し、1例は構造T1強調画像、1例はそれに加えて安静時fMRIも撮影した。療育方法や年齢、聴力像などもデータベースに登録した。

②FCEI updateの推進

FCEI updateに基づいた早期介入につなげるため、聴覚障害児の耳鼻咽喉科診療の模擬動画を作成した。動画撮影および編集を株式会社道々楽者に依頼し、場面1として新生児聴覚スクリーニング両側リファー後の初回外来、場面2としてABRの精密聴力検査で両側重度難聴が確定した後、の2場面を2023年8月4日に撮影した。精密聴力検査を行う施設の耳鼻咽喉科医を対象とした講習会を8月29日に実施し、講習会の中で完成した模擬動画を活用した。

③日本語AVTテキストブックの製作

AVTのエビデンスについて情報収集したうえで、全8章からなる日本語AVT教科書のうち、第3章AVTと聴覚・補聴の執筆を担当した。入稿し、校正も2024年3月で終了した。

D. 考察 E. 結論

①聴覚障害児・者の難聴脳データベースの作製
先天性難聴児のデータベースへの症例登録がすすんでいる。登録したデータから、研究代表者により、難聴脳データベースを用いた人工内耳装用効果予測モデルが構築された。

②FCEI updateの推進

聴覚障害児の診療の模擬動画作成および耳鼻咽喉科医を対象とした講習会の開催により、本邦の耳鼻咽喉科医の聴覚障害児診療の質の向上につながっていると考えられる。

③日本語AVTテキストブックの製作

日本の状況に対応した日本語AVT教科書の出版により、人工内耳装用児の療育の基本であるAVTが日本に浸透していくことが期待される。

F. 研究発表

1. 論文発表

Yamamoto N, Balciuniene J, Hartman T, et al. Comprehensive Gene Panel Testing for Hearing Loss in Children: Understanding Factors Influencing Diagnostic Yield. J Pediatr. 2023 Nov;262:113620. doi: 10.1016/j.jpeds.2023.113620. Epub 2023 Jul 19. PMID: 37473993.

山本修子, 吉富愛, 守本倫子, 他. CQ4-2 耳鼻咽喉科的なフォローアップは有用か, 日本医

療研究開発機構 成育疾患克服等総合研究事業—BIRTHDAY 症候性先天性サイトメガロウイルス感染症を対象としたバルガンシクロビル治療の開発研究班 (編) 先天性サイトメガロウイルス感染症ガイドライン 2023, 診断と治療社 2023

2. 学会発表 (発表誌名巻号・頁・発行年等も記入)

山本修子, 南修司郎, 守本倫子, 他 診療模擬動画作成および動画を用いた講習会の実施. 新スクリーナー後の対応ロールプレイクルズ. 2023年8月29日実施

G. 知的財産権の出願・登録状況 (予定を含む。)

1. 特許取得
該当なし

2. 実用新案登録
該当なし

3. その他
該当なし

健康危険情報があるようでしたら以下にご記入ください。研究代表者のほうでまとめて総括報告書に記載いたします